

AN ECTOPIC URETEROCELE DIAGNOSED IN INTERLABIAL MASS

Tae-Kyu Jang, MD¹, Su-Yeon Lim, MD¹, Jin-Gon Bae, MD¹, Hyuk-Soo Chang, MD², Joon-Cheol Park, MD¹, Jeong-Ho Rhee, MD¹, Jong-In Kim, MD¹

Departments of ¹Obstetrics and Gynecology, ²Urology, Keimyung University School of Medicine, Daegu, Korea

Interlabial mass in infant is not common. Because of similarity of symptoms and signs of those mass and less experience of gynecologist due to those rarity, differential diagnosis is not easy. In infant, there are five common interlabial masses which are prolapsed ectopic ureterocele, urethral prolapse, paraurethral cyst, hydrocolpos and rhabdomyosarcoma. Ureterocele with duplex ureter might be diagnosed, however prolapsed ureterocele through urethra is extremely rare. We found 18 months old girl with interlabial mass and diagnosed as prolapsed ectopic ureterocele by ultrasonography, magnetic resonance imaging and voiding cystourethrography. We managed by endoscopic incision of ureterocele successfully. So we report this case with a brief review of associated literatures.

Keywords: Interlabial mass, Ectopic ureterocele

소아에서 외음부 병변이 발생되어 산부인과 진료를 받는 경우는 흔치 않다. 또한 소아에서 외음부 병변은 외상의 경우가 많고, 대음순 사이의 종괴가 발견되는 경우는 극히 드물다. 그러므로 대음순 사이의 종괴에 대하여 적절한 검사와 진단을 하기는 매우 어렵다. 그 중에서도 이소성 요관류의 경우에는 비뇨기 계통에 동반된 기형을 가지고 있는 경우가 많고 요관의 폐색이나 역류로 인해 신손상을 초래할 수 있기 때문에 정확한 진단과 수술적인 치료를 필요로 하며, 특히 환자의 연령에 맞추어 적절한 치료방법이 선택되어야 한다.

저자들은 생후 18개월 된 여아에서 대음순 사이의 종괴로 나타난 이소성 요관류를 진단하였고 보존적 치료인 내시경적 요관류 절개술만으로 성공적인 결과를 얻은 경험을 간단한 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

임신 중 특이 이상이 없었으며, 환아는 41주에 제왕절개술을 통하여 출생하였다고 하였다. 출생 후에도 특별한 이상 없이 지내왔으며 정상적인 발육과 성장을 보여 왔다고 한다. 내원 당시 대음순 사이에 3 cm 정도의 암적색 종괴가 촉지 되었으며 분명한 요도는 관찰되지 않았으나 종괴 주위로 소변이 배뇨되는 것이 관찰되었다(Fig. 1). 종괴의 아래쪽으로 질 입구가 관찰되었다.

검사소견: 혈액검사 및 소변 검사에서 특이 이상은 관찰되지 않았다. 초음파 검사에서 방광 내에 낭성 구조물과 방광의 우측 하방으로 확장된 관상 구조물이 관찰되었다. 우측 신장의 상부에 국한된 수신증이 관찰되어 중복 요관과 동반된 요관류로 진단하였다(Fig. 2). 자기공명영상에서도 동일한 소견이 관찰되었지만, 자궁, 난소 및 질은 정상 소견을 보여 생식기계와 관련된 기형을 배제할 수 있었다(Fig. 3). 배뇨성 방광 요

증례

환자: 방 0 술, 18개월

주소: 갑자기 발생한 돌출성 질 종괴

산과력: 0-0-0-0

월경력: 없었다.

가족력 및 과거력: 특이소견 없었다.

현병력: 생후 18개월 된 유아로 내원 1주일 전부터 배뇨 시 울고 보채면서 대음순 사이에 분홍빛 종괴가 관찰되었으나, 울지 않을 경우 자연스레 소실되곤 하였다. 내원 전날 심하게 보채 후에 발생한 종괴가 지속되어 소아과를 방문하였다가 산부인과로 의뢰되었다. 환아의 어머니는

Received: 2010.12.21. Revised: 2011. 1.27. Accepted: 2011. 2. 7.

Corresponding author: Joon-Cheol Park, MD

Department of Obstetrics and Gynecology, Keimyung University Dongsan Hospital, 216 Dalseong-ro, Jung-gu, Daegu 700-712, Korea
Tel: +82-53-250-7599 Fax: +82-53-250-7599

E-mail: jcpark@dsmc.or.kr

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0/>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

Copyright © 2011. Korean Society of Obstetrics and Gynecology



Fig. 1. An oval cystic mass protruding through the urethral meatus.

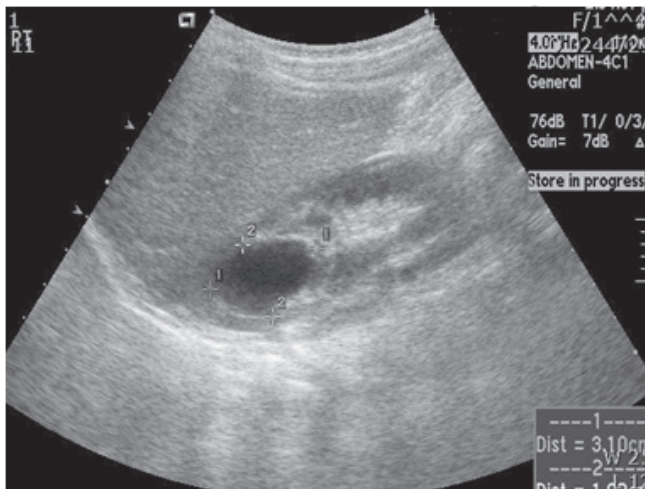


Fig. 2. Abdominal ultrasonography revealed dilatation of the upper pole collecting system of the right kidney, draining ureter, and an ureterocele in the bladder.

도 촬영술에서는 방광 내 큰 음영결손을 관찰할 수 있었으나 요관 역류는 관찰되지 않았다(Fig. 4). 핵의학 스캔에서 우측 신장 상부의 관류 및

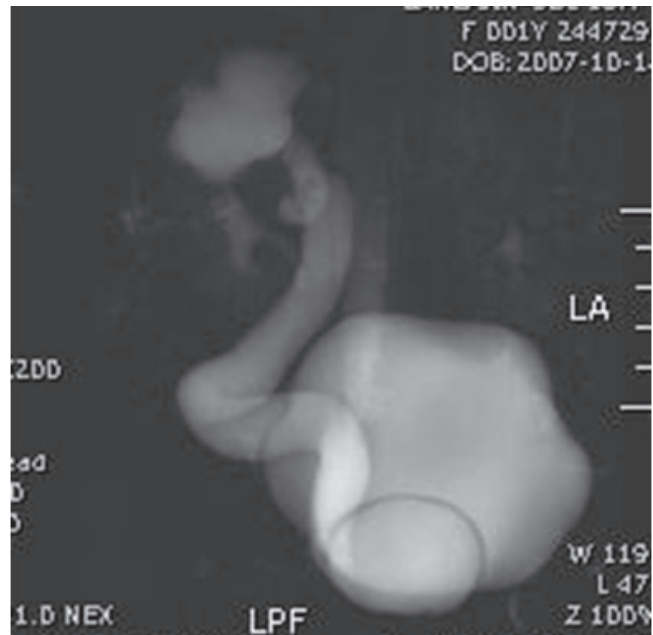


Fig. 3. Magnetic resonance imaging showed a markedly dilated upper pole collecting system of right kidney in association with a large ureterocele.

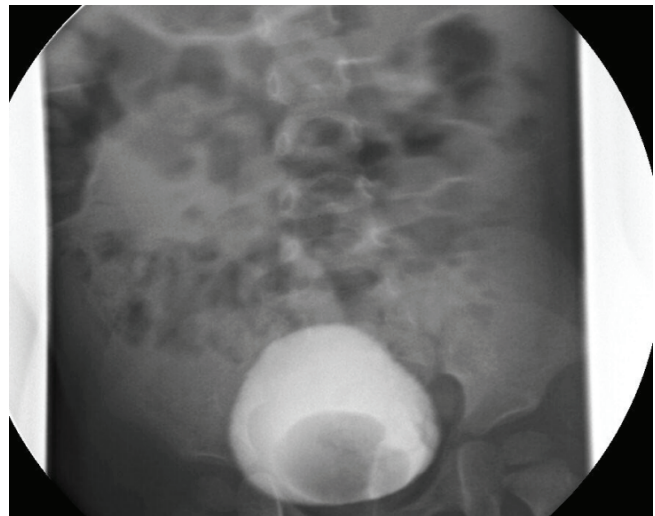


Fig. 4. In voiding cystourethrography, there was an ovoid and well defined filling defect distal to the widened urethra. Vesicoureteral reflux was not observed.

배설 장애가 관찰되었다.

수술 소견 및 경과: 환아는 입원 4일째 전신마취 하에 13 french 경요도 내시경을 방광에 삽입한 후 양측 요관 개구부를 확인하였으며, 우측 요관 개구부 하방에 용기된 출혈성 방광 점막이 관찰되어졌고 3 french 전기 소작기를 이용하여 방광요관 천자술을 시행하였다. 이후 요도를 통한 요관류의 탈출은 관찰되지 않았으며, 술 후 2개월에 시행한 초음파 검사에서 요관류는 관찰되지 않았고 우측 신장 상부의 수신증도 감소하는 소견을 보였다. 1년간의 추적 관찰에서 요관류의 재발이나 합병증은 없었다.

고 찰

여성의 외음부에는 여러 가지 종괴들이 발생할 수 있다. 요도 주위에 요도 언덕(urethral caruncle), 요도 탈출(urethral prolapse), 요관류(ureterocele), 요도계실(urethral diverticulum) 등으로 인해 종괴가 발생할 수 있고 콘딜로마, 바토린선 낭종, 드물게 요도 평활근종, 자궁 내막증 등도 발견 될 수 있다[1]. 그러나 소아의 대음순 사이에 발생하는 종괴는 흔치 않아 감별이 어려울 수 있다. 여성 신생아나 영유아의 외음부에 발생할 수 있는 비교적 흔한 종괴들에는 이소성 요관류(prolapsed ectopic ureterocele), 요도탈(urethral prolapse), 요도결 낭종(paraurethral cyst), 자궁 질 수종(hydrometrocolpos), 질 횡문근육종(rhabdomyosarcoma of vagina) 등이 있는데 주의 깊은 신체검사와 영상학적 검사로 질환들을 감별할 수 있다[2].

요관류(ureterocele)의 대부분은 고정된 위치에 존재하나 5% 미만에서는 요도를 통하여 돌출되어 대음순 사이의 종괴로 나타날 수 있다. 이소성 요관류는 90%에서 중복 요관과 동반되어 있고 대개 신장 상부와 연결되어 수신증을 동반한다. 중복 요관은 비교적 흔한 선천성 요로계 기형으로서 1.7~4.2%의 빈도를 보이며 방광요관 역류와 요관 폐쇄로 인한 요관류를 잘 동반한다. 발생학적으로 요관은 태생 4~5주에 원뇨관(Wolffian duct)로부터 요관아(ureteral bud)가 발생되고 후신(metanephros)과 합쳐지는데 이 시기에 다른 요관아(accessory bud)가 발생되어 후신 상부와 결합될 때 중복 요관이 형성된다. 이 또 하나의 다른 요관아는 정상 요관의 후방을 경유하여 하방으로 이동하기 때문에 정상 요관보다 하방 및 전방 내측으로 방광에 개구된다. 정상 요관아와 연결되는 하부신은 정상으로 발달한다[3]. 요관류는 원위부 요관의 낭성 확장으로서 방광 내(intravesicle)와 이소성(ectopic)으로 나눌 수 있는데 요도를 통하여 탈출되는 경우는 5% 정도라는 보고가 있다[4]. 요관류가 탈출되어 형성된 낭종은 간헐적으로 반복되거나 지속적일 수도 있는데 요관류의 표면은 방광의 점막이므로 매끈하고 둥근 모양이며 탈출 기간이 짧을 경우 밝은 핑크색, 기간이 길어질 경우 허혈성 변화에 의해 붉은 색에서 보라색으로 관찰되며 크기도 다양하다. 요관류는 요관을 통해 탈출되므로 요도의 개구부가 종물을 둘러싸고 있으며 요관류의 크기가 커서 요도를 완전히 막게 되는 경우 요도 개구부를 확인하기 힘들며 배뇨장애를 나타내기도 하는데 일반적으로 소변은 요관류의 주위로 흘러내리게 된다. 간혹 요관류의 표면에 매우 작은 요관의 개구부가 보이고 그곳을 통해 소변이 흘러 나올 수 있다[5]. 본 증례의 경우에는 환아가 배뇨 시에 울며 보채는 등 배뇨 장애를 보이면서 종괴의 주변부로 흘러내리는 특징적인 양상을 보였으며 자연스럽게 소실되었다가 재발되는 양상과 종괴 하부의 질입구 확인 등 신체검사만으로도 요관류를 진단할 수 있었다.

감별 질환으로서 요도 탈출(urethral prolapse)은 요도구를 통해 요도의 점막이 돌출되어 발생하는 부종성의 종괴로 요도구를 중심으로 주위를 둘러싼 형태를 보이므로 소변이 종괴의 중심부에서 나오는 것을 관찰할 수 있다. 흔히 혈뇨를 동반하며 출혈 증상을 보이지만 종괴의 하부에 질구가 구분되므로 조기 초경 등의 질 출혈로 의심하는 일이 없어

야 한다[6]. 종괴의 정중부에 있는 요도구를 통해 배뇨관을 방광까지 삽입해 붉으로써 진단이 가능하나 이소성 요관 과의 감별을 위해서 배설성 요로 조영술이나 방광경 검사를 시행해 볼 수도 있다[7]. 요도 결 낭종(paraurethral cyst)은 뮐러관(müllerian duct)나 중신관(mesonephric duct) 또는 비뇨 생식동(urogenital sinus)의 흔적이 변성되어서 발생하는 것으로 여겨지며 크기에 따라 다르나 일반적으로 잘 인지되지 못하는 상태에서 자연적으로 파열되어 배농 됨으로써 알게 되는 경우가 많다[8]. 요도 개구부가 낭종에 의해 한쪽으로 밀리면 소변 방향이 옆으로 치우치게 된다. 요도 개구부가 낭종과 구분되어 낭종의 측면에서 잘 관찰되면 진단에 무리가 없으나 낭종 천자를 시행하여 유액상의 분비물을 확인하거나 조영제를 주사했을 때 비뇨계통과 연결됨이 없이 국한되어 있는 것을 확인하면 진단에 도움이 될 수 있다[9]. 질 수종(hydrocolpos)은 무공 처녀막(imperforated hymen), 횡 질 중격(transverse vaginal septum), 질 폐쇄증(vaginal atresia)이 있는 여아에서 모체의 에스트로겐의 영향으로 자궁과 질의 점막에서 생성된 분비물이 질 안에 축적되어 발생하며 질 부위와 함께 자궁까지 확장된 경우 자궁 질 수종(hydrometrocolpos)이라 한다. 초음파를 이용하여 출산 전에 태아의 복부에 거대한 복부 종괴의 형태로 관찰 될 수 있는데 단순한 무공처녀막에 의한 경우에는 동반기형이 없으나, 질 폐쇄나 상부 횡 질 중격에 의한 질 수종은 비뇨생식계나 위장관계의 선천성기형과 관련될 수 있고 동반기형이 없는 경우에도 질 수종이 인접기관인 방광, 요관, 장 그리고 골반 내 정맥을 압박하여 잔뇨감, 변비, 하지 부종 등의 증상을 보일 수 있으므로 초음파 검사가 필요하다[10]. 횡문근육종(rhabdomyosarcoma)은 2~6세, 15~19세에 주로 발생하며 영유아기에는 방광, 질, 전립선, 두경부에 청소년기에는 고환 주위나 복부 장기에 주로 발생한다[11]. 소아의 외음부에 발생하는 횡문근육종은 주로 포도상형(botryoid sarcoma)이며 질구를 통해 빠르게 발생해나가므로 종괴가 클 경우 이학적 검사만으로는 원발 부위를 알 수 없어 초음파 검사가 필요하며 성장속도가 매우 빨라 질 출혈 등의 증상이 발생한 경우 이미 주변 임파선, 간, 폐, 뼈에 전이되었을 가능성이 높으므로 computerized tomography, magnetic resonance imaging 등으로 확인해보아야 한다[12].

과거에는 이소성 요관류의 진단은 발열 또는 배뇨증상을 호소하는 소아 환자에서 주로 신체검사로 이루어졌으나 최근에는 사전 초음파의 발달로 출생 전에 요관류가 발견되는 빈도가 증가하고 있다. 요관류 진단에 있어 초음파 검사가 비교적 경제적이며 비 침습적인 영상 방법으로서 중요하며, 대개 방광 내의 요관류나 동반된 중복 요관을 발견할 수 있다. 그러나 방광 밖의 요관류의 경우에는 다른 주변 장기와의 관계나 외음부 종괴를 형성하는 다른 질환을 감별하는 데 있어 자기공명영상이 도움이 될 수 있으며 배뇨성 방광 요도 촬영술이나 신주사를 통해서 상극신(upper pole of kidney)의 기능, 방광에서의 역류정도를 확인하여 향후 치료계획을 세우는데 도움을 얻을 수도 있다[13,14].

요관류의 치료 목표는 감염을 방지하고 신기능을 유지하며 정상 신 조직을 보호하는 것으로서 내시경적 절개술, 상극신절제술, 요관류 절제 및 요관 요관문합 또는 요관 신우문합술 등이 있으나 치료방법이 완

전히 정립되어있지는 않아 환자의 연령, 역류의 유무, 요로감염의 정도에 따라 개별적인 선택이 필요하다. 과거 시행하던 요관류 절제술은 수술 후 역류의 문제로 방광에 추가적인 수술이 필요하므로 더 이상 시행되지 않고 결정적인 치료로서 상극신 절제술이나 요관 요관문합술 또는 요관 신우문합술이 제시되었다. 그러나 요관류를 가진 환자가 소아인 점을 고려하여 보다 덜 침습적인 술식이 요구되었다. 내시경적 요관류 절개술은 9-11 french의 방광경을 통해 3 french의 가는 전극을 이용하여 요관류의 하방에 작은 절개를 하는 방법으로 방광 내 요관류에서는 약 90%, 이소성 요관류에서는 약 30%정도의 근치율을 보였다[15]. 본 증례에서도 내시경 절개술을 시행하여 이소성 요관류를 성공적으로 치료하였으며 1년간의 추적관찰에서도 요관류의 재발이나 합병증을 보이지 않아 영유아에서의 요관류에 일차적인 치료법으로서 내시경 절개술을 먼저 고려해보는 것이 좋을 것으로 생각된다.

References

1. Fletcher SG, Lemack GE. Benign masses of the female periurethral tissues and anterior vaginal wall. *Curr Urol Rep* 2008;9:389-96.
2. Nussbaum AR, Lebowitz RL. Interlabial masses in little girls: review and imaging recommendations. *AJR Am J Roentgenol* 1983;141:65-71.
3. Seo CS, Lee MH, Hwang ES, Kim SH, Kim HS, Lee KW. A case of bilateral duplex ureter with ureterocele diagnosed by prenatal ultrasound. *Korean J Obstet Gynecol* 1994;37:1858-64.
4. Scott JE. The single ectopic ureter and the dysplastic kidney. *Br J Urol* 1981;53:300-5.
5. Klauber GT, Crawford DB. Prolapse of ectopic ureterocele and bladder trigone. *Urology* 1980;15:164-6.
6. Moffett JD, Banks R Jr. Prolapse of the urethra in young girls. *J Am Med Assoc* 1951;146:1288-90.
7. Devine PC, Kessel HC. Surgical correction of urethral prolapse. *J Urol* 1980;123:856-7.
8. Blaivas JG, Pais VM, Retik AB. Paraurethral cysts in female neonate. *Urology* 1976;7:504-7.
9. Das SP. Paraurethral cysts in women. *J Urol* 1981;126:41-3.
10. Hahn-Pedersen J, Kvist N, Nielsen OH. Hydrometrocolpos: current views on pathogenesis and management. *J Urol* 1984;132:537-40.
11. Flamant F, Gerbaulet A, Nihoul-Fekete C, Valteau-Couanet D, Chassagne D, Lemerle J. Long-term sequelae of conservative treatment by surgery, brachytherapy, and chemotherapy for vulval and vaginal rhabdomyosarcoma in children. *J Clin Oncol* 1990;8:1847-53.
12. Mierau GW, Favara BE. Rhabdomyosarcoma in children: ultrastructural study of 31 cases. *Cancer* 1980;46:2035-40.
13. Arap S, Nahas WC, Alonso G, Denes FT, Martins LR, Menezes de Goes G. Assessment of hydroureteronephrosis by renographic evaluation under diuretic stimulus. *Urol Int* 1984;39:170-4.
14. Ilica AT, Kocaoglu M, Bulakbasi N, Surer I, Tayfun C. Prolapsing ectopic ureterocele presenting as a vulval mass in a newborn girl. *Diagn Interv Radiol* 2008;14:33-4.
15. Coplen DE. Management of the neonatal ureterocele. *Curr Urol Rep* 2001;2:102-5.

돌출된 질종괴에서 진단된 이소성 요관류

계명대학교 의과대학 ¹산부인과교실, ²비뇨기과학교실

장태규¹, 임수연¹, 배진곤¹, 장혁수², 박준철¹, 이정호¹, 김종인¹

영유아가 산부인과 진찰을 요하는 경우는 흔치 않으나 간혹 대음순 사이의 돌출된 종괴로 병원에 오는 경우가 있다. 그러나 질환의 희소성 때문에 의사의 경험이 많지 않을 뿐만 아니라 종괴를 보이는 질환들의 증상이나 징후가 유사한 점이 많아 감별진단이 쉽지 않다. 대음순 사이 종괴를 보이는 경우 감별해야 할 질환으로는 돌출성 이소성 요관류(prolapsed ectopic ureterocele), 요도탈(urethral prolapse), 요도결 낭종(paraurethral cyst), 자궁 질 수종(hydrometrocolpos), 질횡문근육종(rhabdomyosarcoma of vagina) 등이 있다. 종괴 요관과 동반된 이소성 요관류는 간혹 발견되나 요도를 통하여 탈출된 요관류는 흔치 않다. 저자 등은 생후 18개월 여아에서 대음순 사이의 돌출된 종괴로 내원하여 초음파, 자기공명영상 및 배뇨성 방광요도 촬영술을 통하여 이소성 요관류로 진단하고 경요도 내시경 하 요관 천자술을 시행하였던 1예를 간단한 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

중심단어: 대음순사이 종괴, 이소성 요관류